Journal of Surgery
[Jurnalul de Chirurgie]

Review Open Access

# Mature teratoma of the pancreas

**Șor Elina, Gheorghița Vadim, Mișin Igor**
Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”, Chișinău, Republica Moldova

**Abstract.** Teratomas are neoplasms of germ cell origin and they can be classified as mature or immature on the basis of the presence of immature neuroectodermal elements within the tumor; the mature type can be further classified as solid or cystic. According to literature review, the pancreas is the rarest site of presentation of teratomas. The majority of patients were symptomatic by unspecific gastrointestinal complaints. Preoperative diagnosis is challenging, and surgical resection is the standard treatment.

**Keywords:** pancreas, mature teratoma, management

## Introducere

Teratomul reprezintă o tumoră congenitală care rezultă din dezvoltarea embrionară anormală a celulelor polipotente, ce sunt capabile să genereze țesuturi din cele trei straturi germinale: endoderm, mezoderm și ectoderm [1 – 6]. Teratoamele pot fi clasificate ca *mature* sau *imature* pe baza prezenței elementelor neuroectodermice imature în cadrul tumorii [2], cele mature sunt divizate în teratoame *solide* și *chistice*. Datorită predominării diferențierii țesuturilor ectodermice, teratoamele mature chistice sunt cunoscute și sub denumirea de *chisturi dermoide* [7].

## Materiale și Metodă

Pentru realizarea acestui articol am studiat sursele bibliografice din bazele de date on-line Google Scholar și PubMed. Căutarea a fost efectuată după următoarele cuvinte cheie: „*teratoma of the pancreas*” și „*mature teratoma*”. A fost colectată și procesată informația despre manifestările clinice caracteristice, metodele de diagnostic și opțiunile de tratament, datele colectate fiind analizate, comparate și sintetizate.

## Rezultate

Prelucrarea articolelor din bazele de date susmenționate, în concordanță cu criteriile de căutare, a evidențiat 163 de citări potențial eligibile. După înlăturarea duplicatelor și a studiilor nerelevante au fost identificate 41 de surse din literatura de specialitate prepoderent de origine anglo-saxonă, care au fost utilizate pentru dezvoltarea și realizarea ideilor principale ale acestei tematici.

Teratomul matur al pancreasului (TMP) reprezintă o raritate în literatura de specialitate, și, respectiv, datele mondiale sunt limitate la câteva rapoarte de caz (< 60 de cazuri până în prezent) [8]. Prima mențiune de teratom chistic al pancreasului a fost raportată în 1918 de către Kerr [9], însă

**Corresponding author**. E-mail: elina.sor@usmf.md

**Received:** January 10, 2024; **Accepted: March** 3, 2024; **Published: March** 31, 2024
**Citation: Șor Elina, Gheorghiță V, Mișin I.: Mature teratoma of the pancreas. Journal of Surgery [Jurnalul de chirurgie]. 2024; 20(1): 10 - 15, [Article in Romanian]. DOI: 10.22551/JSURG.2024.01.02**
**Copyright :** © 2024 : Șor Elina et al. This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original author and source are credited

dar după cazul publicat de Judd [10] în 1922 chisturile dermoide au fost incluse în clasificarea leziunilor chistice pancreatice de către Primrose [11].

**Aspectul epidemiologic.** Conform datelor literaturii, TMP se detectă la pacienți în vârsta variind de la 4 luni până la 74 de ani, prepoderent într-a patra decadă a vieții. Este necesar de menționat faptul că cele mai multe cazuri TMP raportate sunt constatate la grupul de vârstă adultă și doar 10 rapoarte [12 – 21] aparțin cohortei de vârstă pediatrică variind de la 4 luni până la 16 ani. Revizuirea literaturii confirmă prezența predilecției după gender pentru TMP, prin urmare a fost observată preponderență semnificativă masculină (67.74%) în numărul de cazuri raportate, ceea ce se confirmă și în alte studii [1, 6 – 8, 12, 16, 18, 20 – 26].

**Aspectul etiopatofiziologic.** Etiopatofiziologia TMP rămâne a fi una incertă; în literatura de specialitate, teoriile propuse includ apariția teratomelor în timpul embriogenezei când celulele germinale migratoare devin „deplasate" în drum spre organele lor adecvate [22, 23]. Astfel teratoamele mature reprezintă leziuni congenitale bine diferențiate, evidențiate din includerea pielii la momentul embrionar al închiderii șanțului neural [5, 23, 25]. Prin urmare, ele ca regulă, sunt localizate în ovare, însă pot fi observate și pe traiectul migrației celulelor ectodermice de-a lungul liniei mediane a corpului, cum ar fi: testicolele, craniul, creierul, mediastinul, epiploonul, retroperitoneul, regiunea sacrococcigiană, gâtul și viscerele abdominale, iar cel mai rar loc de prezentare este pancreasul [5, 6, 7, 23, 25, 27]. Studierea literaturii detectă că TMP sunt observate oriunde în pancreas [22, 26, 28], însă conform Li Z et al. [28] cea mai frecventă localizare este descrisă în corp (35.6%), urmată de cap (33.3%), coadă (15.5%), corp/coadă (8.9%) și cap/corp (6.7%). Dimensiunea tumorilor variază de la 2,2 cm [29] la 25 cm [3], dimensiunea medie fiind de aproximativ 8 cm [22, 28, 30]. Dimensiunile TMP la populația pediatrică au variat între 9 și 18 cm, majoritatea (60.0%) fiind localizate în corpul pancreasului [12]. Nu au fost observate teratoame mature simultane extrapancreatice sau alte tumori [22].

**Aspectul clinic.** Conform literaturii de specialitate, în majoritatea cazurilor TMP sunt asimptomatice și sunt detectate incidental în timpul examenului imagistic [5 – 7, 13, 22, 23]. Este necesar de menționat faptul, că cele simptomatice TMP au marcajul clinic este destul de divers și nespecific [5 – 7, 13, 22, 23]. Prin urmare manifestările clinice includ dureri abdominale [1, 6 – 8, 22 – 26, 31, 32] sau lombare [22, 23, 31], grețuri și vome [6 – 8, 12, 13, 17, 19, 22, 23, 26], disfagie [7], scădere în greutate [8, 18, 23, 26, 32], febră [23]. Evaluarea pacientului reprezintă un test efectuat în mod obișnuit care poate furniza informații suplimentare importante pentru clinicieni, cu toate acestea este mai puțin util în stabilirea diagnosticului TMP. Pe de altă parte, o palpare atentă a abdomenului poate dezvălui o formațiune tumorală, însă acest fapt mai frecvent este relevat la copii decât la adulți [8, 12 – 17, 19 – 21, 33].

**Aspectul diagnostic.** Datorită lipsei semnului patognomonic al TMP și rarității patologiei detectarea diagnosticului preoperator este dificilă [1 – 33]. Evaluarea *testelor de laborator* de rutină deseori prezintă limite normale și nu poate distinge procesul de alte cauze ale patologiei abdominale [8], cu excepția cazurilor în care există comunicare sau obstrucție ductală biliară sau pancreatică [8, 18, 25, 34]. Este cunoscut faptul, că nivelurile serice ale CA 19–9 cresc în bolile neoplazice și organ-specifice, precum și în bolile sistemice [35]. Analizarea literaturii detectă că determinarea concentrației serice a CEA, CA19-9, α-FP se

încadrează în valorile de referință [7, 8, 32]. În același timp, într-un număr de cazuri, a fost înregistrată elevarea indicelor de CA-125 și CA19-9 [1, 6, 26].

Datorită variațiilor simptomelor clinice nespecifice și a lipsei semnului patognomonic, rarității patologiei, detectarea cu precizie a prezenței TMP este dificilă [22, 23]. Cu toate acestea, conform datelor literaturii de specialitate, metodele imagistice au un rol important în detectarea diagnosticului [1, 5 – 8, 22, 23, 26, 28]. Aspectul *radiologic* al chisturilor dermoide pancreatice, depinde de compoziția lor [23]. Conform datelor literaturii, o combinație de grăsimi detectabile radiologic, niveluri de grăsime-lichide și calciu în cadrul aceleiași leziuni este considerată sugestivă pentru un teratom matur [23, 36, 37].

La examenul *ecografic* se detectă TMP ca o formațiune chistică bine definită, cu margini distincte, precum și absența septurilor în interiorul cavității tumorale [23, 32, 33]. Zonele cu conținut ridicat de grăsime se evidențiază hiperecogen, în timp ce țesuturile calcificate sunt detectate ca focare de intensitate mare cu umbrire acustică [23, 24, 29, 37]. În prezența unei componente solide, se observă o ecogenitate crescută în formațiunea chistică [1].

Aspectele *tomografiei computerizate* (TC) depind de proporțiile relative ale diferitelor țesuturi (solide, chistice și lipide) al TMP. Conform datelor literaturii, calcificările sunt ca regulă observate în componenta solidă a tumorii sau în capsulă [1, 33]. În observațiile publicate, aceste tumori sunt vizualizate ca formațiuni chistice hipodense cu o capsulă bine definită cu pereții subțiri, în absența limfadenopatiei și invaziei vasculare [1, 7, 31, 33] sau formarea solid-chistică [32, 33]. După Zhou XH. et al. (2020), tomografia cu substanță de contrast a tumorilor chistice-solide permite evidențierea imaginii heterogene cu îmbunătățire moderată în regiunea capsulei formațiunii [1]. În unele cazuri a fost observată compresia gastrică [22] și rinichiului [32] din partea tumorii.

La o evaluare ulterioară cu *imagistica prin rezonanță magnetică* (IRM), imaginile ponderate T1 detectă leziuni chistice cu margini distincte și niveluri de grăsime-fluid cu semnal heterogen și hiperintens în interiorul tumorii pe T1W [6, 8, 23] și de intensitate scăzută pe imagini T2W cu suprimare a grăsimilor (T2W-Fs) [1, 23]. Astfel constatările atât la TC cât și la IRM sunt foarte specifice, oferind un diagnostic precis în majoritatea cazurilor [23, 24, 29, 37].

*Biopsia excizională sau citologia prin aspirare cu ac fin (CAAF)* permite stabilirea unui diagnostic cert [23]. Markovsky și Russin [38] au descris diagnosticarea preoperatorie a teratomului chistic cu ajutorul CAAF. Autorii au raportat prezența celulelor scuamoase benigne mature și resturilor de cheratină, celulelor inflamatorii la examenul citologic, pe care le-au considerat diagnostic. Actualmente CAAF se recomandă pentru a confirma un diagnostic pre operator dacă dovezile radiologice nu sunt concludente pentru evaluarea unei leziuni chistice a pancreasului [23, 29]. Koomalsingh et al. a sugerat că CAAF este rezervat pacienților asimptomatici și indivizilor considerați cu risc ridicat pentru intervenție chirurgicală [29]. În pofidă modalităților disponibile, un diagnostic preoperator al TMP poate fi evaziv, în special pentru leziunile mai mari (>3 cm) [23]. Într-un studiu realizat de Volmar et al. au fost comparate diagnosticele preoperatorii și postoperatorii la 1000 de pacienți cu leziuni chistice ale pancreasului cu detectarea ratei fals pozitive de 0.3% *vs* rată fals negativă de 14.3% în urma evaluării preoperatorii cu CAAF ghidat ecografic sau tomografic [39]. Prin urmare, este necesară examinarea biochimică și citologică a

lichidului chistic [22]. Prezența celulelor columnare cu mucină sugerează un chist mucinos, în timp ce prezența celulelor epiteliale plate benigne cu citoplasmă clară sugerează chisturi seroase; celulele inflamatorii precum macrofagele și histiocitele în absența celulelor epiteliale sugerează un pseudochist, dar această constatare este nespecifică, deoarece poate fi observată și în chisturile degenerate [22]. Astfel prezența celulelor scuamoase ar trebui să alerteze citopatologul despre posibilitatea TMP. Cu toate acestea, examenul citologic poate confirma doar în aproximativ o treime din cazuri caracteristici care sugerează un chist cu celule scuamoase [40]. Al doilea test efectuat este determinarea CEA în lichidul chistic aspirat: o concentrație > 200 ng/mL este foarte sugestivă, însă nu decisivă pentru chistul mucinos (sensibilitate 62.0% și specificitate 93.0%) [41].

**Managementul.** Revizuirea literaturii detectă că *tratamentul chirurgical* reprezintă metoda de elecție pentru TMP, în pofida naturii benigne a acestor formațiuni chistice ale pancreasului, dar și datorită dificultății de a stabili cu exactitate natura acestor formațiuni ale pancreasului [22, 31]. Conform cercetării, în majoritatea cazurilor intervențiile chirurgicale au fost efectuate prin abordul deschis [6, 22, 31, 32], doar în cazuri rare au fost utilizate tehnologiile miniminvazive [8]. Trecerea în revistă a literaturii în cadrul studiului prezent detectă următoarele metode chirurgicale acceptate: (1) intervenții de drenaj (extern/intern); (2) intervențiile organ menajate prin excizia simplă a tumorii (enucleare sau cistectomie) [33] și (3) rezecție [31]. Cu toate acestea, actualmente prima opțiune nu este recomandată din cauza riscului major de apariție a fistulelor persistente și a necesității unei intervenții chirurgicale repetate [31]. Enuclearea sau cistectomia se indică din lipsa observațiilor de malignitate a acestor tumori și trebuie însoțită de un examen histologic intraoperator (secțiune congelată intraoperatorie) [31]. Conform Zhou XH. et al. (2020) după enucleația tumorii localizate în capul pancreasului, intervenția chirurgicală este completată cu coledojejunostomie pe ansă Roux și gastroenteroanatomoză [31]. Opțiunile pentru intervențiile de rezecție pentru TMP includ: pancreatoduodenectomie [32], pancreatectomie distală cu păstrarea splinei [8, 22], pancreatectomie distală cu splenectomie [6, 31]. Este necesar de menționat faptul că disecția ganglionilor limfatici nu este descrisă [8]. Perioada de monitorizare după intervenții chirurgicale a variat de la 4 luni până la 6 ani cu evoluție favorabilă și fără dovezi de recidivă tumorală [1, 7, 8, 32].

**Aspectul histopatologic.** Macroscopic constatările tipice pentru TMP reprezintă formațiuni chistice cu o capsulă bine definită și cavitatea cu mase de keratină, țesut adipos și păr [1, 7, 8, 31, 32]. Examenul microscopic relevă formațiunea chistică, care este căptușită din interior cu un strat de epiteliu scuamos keratinizant cu glande sebacee și anexe dermice (foliculi de păr). Capsula chistului conținea țesut limfoid și celule inflamatorii [1,7, 22, 32, 33]. În plus, într-o serie de rapoarte a fost descris prezența epiteliul respirator ciliat, epiteliul intestinal, focarele celulelor caliciforme, mușchiul neted și țesutul glial [22, 33]. Iacono C. et al. [32] a descoperit celule gigantice de corpuri străine. Unii cercetători raportează de absență a țesuturilor imature, precum și semne de malignitate în membrana TMP și în țesutul adiacent al pancreasului [7, 8, 22].

**Concluzii**

Teratomul matur al pancreasului reprezintă o patologie orfană, congenitală, cu informații destul de limitate referitor la diagnosticul și tratamentul în literatura de specialitate. Diagnosticul preoperator este o

provocare dificilă din cauza rarității patologiei și a lipsei datelor specifice, însă unele modalități imagistice pot oferi informații utile. Rezecția chirurgicală reprezintă standardul de aur pentru TMP, realizează un diagnostic concludent, tratamentul definitiv și evită complicațiile asociate cu drenajul chistului. Clinicienii ar trebui să fie mai conștienți de TMP și să includă teratoamele mature în diagnosticul diferențial și managementul leziunilor pancreatice.

**Declarația de conflict de interese.** Autorii declară că nu se află în conflict de interese financiare sau non financiare pentru datele și informațiile prezentate în articol.

## Bibliografie

1. Zhou XH, Ma JK, Valluru B, Sharma K, Liu L, Hu JB. Diagnosis and differentiation of mature cystic teratoma of pancreas from its mimics: A case report. Medicine (Baltimore). 2020;99(47):e23267.
2. Ben Ameur H, Boujelbene S, Abdelhedi C, Gheriani O, Beyrouti MI. Mature cystic teratoma of the pancreas. Updates Surg. 2012;64(4):311-4.
3. Daghfous A, Baraket O, Ayadi S, Bedioui H, Heifa A, Jouini M, Makni A, Rebai W, Chebbi F, Ksantini R, Fteriche F, Kacem MJ, Ben Safta Z. Mature teratoma of the pancreas diagnosed by fine-needle aspiration. Arab J Gastroenterol. 2011;12(2):92-3.
4. Rivkine E, Goasguen N, Chelbi E, Couvelard A, Vullierme MP, Vilgrain V, Hammel P, Sauvanet A. Tératome kystique du pancréas [Cystic teratoma of the pancreas]. Gastroenterol Clin Biol. 2007;31(11):1016-9.
5. Degrate L, Misani M, Mauri G, Garancini M, Maternini M, Moltrasio F, Cuttin MS, Romano F, Uggeri F. Mature cystic teratoma of the pancreas. Case report and review of the literature of a rare pancreatic cystic lesion. JOP. 2012;13(1):66-72.
6. Tucci G, Muzi MG, Nigro C, Cadeddu F, Amabile D, Servadei F, Farinon AM. Dermoid cyst of the pancreas: presentation and management. World J Surg Oncol. 2007;5:85.
7. Tasis N, Prountzopoulou AA, Skafida E, Arnaouti M, Tsirlis T, Plastiras A, Manatakis DK, Arnogiannaki N, Korkolis DP. Giant teratoma of the pancreas expanding to the mediastinum: Rare tumor and literature review. Rare Tumors.2022;14:20363613221147470.
8. Munoz C, Lindner C, Pizarro F, Pino C. Mature cystic teratoma of the pancreas: an unusual indication for laparoscopic distal pancreatectomy. Arq Bras Cir Dig. 2022;35:e1693.
9. Kerr AA. Cysts and pseudocysts of the pancreas. Surg Gynecol Obstet 1918; 27: 40.
10. Judd ES. Cysts of the pancreas. Minnesota Med 1921; 4: 75.
11. Primrose A. Pancreatic cysts and pseudocysts. Surg Gynecol Obstet 1922; 34: 431-436.
12. Wang J, Yin Y, Cai Z, Shen C, Yin X, Chen X, Zhao Z, Zhang B. Pediatric pancreatic teratoma: A case report and literature review. Medicine (Baltimore). 2019;98(46):e18001.
13. Wang Y, Jin S, Wang W, Lu C, Liu R, Zhong L, Li Y. Childhood cystic teratoma of the pancreas: clinical presentation, evaluation and management. Pancreatology. 2014;14(4):312-5.
14. Sasaki T, Saka R, Tanaka N, Zenitani M, Oue T. A case of superior mesenteric artery syndrome developed after pancreatic teratoma resection. Journal of pediatric surgery case reports. 2017; 17:37-41.
15. Das PC, Radhakrishna K, Rao PL. Cystic teratoma of the pancreas. Pediatr Surg Int. 1996;11(2-3):177-8.
16. Bittner K, Sarrazin O. Potworniak trzustki u 2-letniej dziewczynki [Pancreatic teratoma in a 2-year-old girl]. Wiad Lek. 1970;23(14):1251-2.
17. Assawamatiyanont S, King AD Jr. Dermoid cysts of the pancreas. Am Surg. 1977;43(8):503-4.
18. Kela M, Singh S, Lahoti B. Immature cystic teratoma of head of pancreas. J Indian Assoc Pediatr Surg. 2008;13(2):85-7.
19. Decourcy JL. Dermoid cyst of pancreas: case report. Ann Surg. 1943;118(3):394-5.
20. Iovchev II. Nagnoivshaiasia kista podzheludochnoĭ zhelezy [Suppurative dermoid cyst of the pancreas]. Vestn Khir Im I I Grek. 1972;107(3):124.
21. Brodeur GM, Howarth CB, Pratt CB, Caces J, Hustu HO. Malignant germ cell tumors in 57 children and adolescents. Cancer. 1981;48(8):1890-8.
22. Ahmed A, Peng L, Agrawal D. Mature cystic teratoma of the pancreas: Role of endoscopic ultrasound. Pancreatology. 2015;15(4):445-8.
23. Albayrak A, Yildirim U, Aydin M. Dermoid cyst of the pancreas: a report of an unusual case and a

review of the literature. Case Rep Pathol. 2013;2013:375193.
24. Jacobs JE, Dinsmore BJ. Mature cystic teratoma of the pancreas: sonographic and CT findings. AJR Am J Roentgenol. 1993;160(3):523-4.
25. Lane J, Vance A, Finelli D, Williams G, Ravichandran P. Dermoid cyst of the pancreas: a case report with literature review. J Radiol Case Rep. 2012;6(12):17-25.
26. Scheele J, Barth TF, Wittau M, Juchems M, Henne-Bruns D, Kornmann M. Cystic teratoma of the pancreas. Anticancer Res. 2012;32(3):1075-80.
27. O'Donovan EJ, Thway K, Moskovic EC. Extragonadal teratomas of the adult abdomen and pelvis: a pictorial review. Br J Radiol. 2014;87(1041):20140116.
28. Li Z, Ke N, Liu X, Gong S. Mature cystic teratoma of the pancreas with 30 years of clinical course: A case report. Medicine (Baltimore). 2018;97(15):e0405.
29. Koomalsingh KJ, Fazylov R, Chorost MI, Horovitz J. Cystic teratoma of the pancreas: presentation, evaluation and management. JOP. 2006;7(6):643-6.
30. Campani D, Gallippi G, Granai M, De Lio N, Boggi U. Dermoid cyst of the pancreas. Int J Colorectal Dis. 2013;28(4):597-8.
31. Zhang AY, Thompson SK, Game PA, Allin JJ. Images for surgeons. Cystic teratoma of the pancreas: a rare entity. ANZ J Surg. 2008;78(12):1130-1.
32. Iacono C, Zamboni G, Di Marcello R, Zicari M, Maran M, Montresor E, Nicoli N, Serio G. Dermoid cyst of the head of the pancreas area. Int J Pancreatol. 1993;14(3):269-73.
33. Yu CW, Liu KL, Lin WC, Li YW. Mature cystic teratoma of the pancreas in a child. Pediatr Radiol. 2003;33(4):266-8.
34. Chakaravarty KD, Venkata CD, Manicketh I, Singh R, Mathew P, Devashetty S, Chetty PK. Mature Cystic Teratoma of the Pancreas. ACG Case Rep J. 2016;3(2):80-1.
35. Malaguarnera G, Latteri S, Madeddu R, Catania VE, Bertino G, Perrotta RE, Dinotta F, Malaguarnera M. High Carbohydrate 19-9 Antigen Serum Levels in Patients with Nonmelanoma Skin Cancer and Primary Occult Cancer. Biomedicines. 2020;8(8):265.
36. Mester M, Trajber HJ, Compton CC, de Camargo Júnior HS, de Almeida PC, Hoover HC Jr. Cystic teratomas of the pancreas. Arch Surg. 1990;125(9):1215-8.
37. Davidson AJ, Hartman DS, Goldman SM. Mature teratoma of the retroperitoneum: radiologic, pathologic, and clinical correlation. Radiology. 1989;172(2):421-5.
38. Markovsky V, Russin VL. Fine-needle aspiration of dermoid cyst of the pancreas: a case report. Diagn Cytopathol. 1993;9(1):66-9.
39. Volmar KE, Vollmer RT, Jowell PS, Nelson RC, Xie HB. Pancreatic FNA in 1000 cases: a comparison of imaging modalities. Gastrointest Endosc. 2005;61(7):854-61.
40. VandenBussche CJ, Maleki Z. Fine-needle aspiration of squamous-lined cysts of the pancreas. Diagn Cytopathol. 2014;42(7):592-9.
41. Park WG, Mascarenhas R, Palaez-Luna M, Smyrk TC, O'Kane D, Clain JE, Levy MJ, Pearson RK, Petersen BT, Topazian MD, Vege SS, Chari ST. Diagnostic performance of cyst fluid carcinoembryonic antigen and amylase in histologically confirmed pancreatic cysts. Pancreas. 2011;40(1):42-5.